



TITLE:

男子外性器硬化性脂肪肉芽腫:2症例の報告と本邦報告72症例の統計的検討

AUTHOR(S):

児島, 康行; 井上, 彦八郎; 足立, 靖; 池原, 進; 大島, 升

CITATION:

児島, 康行 ...[et al]. 男子外性器硬化性脂肪肉芽腫:2症例の報告と本邦報告72症例の統計的検討. 泌尿器科紀要 1992, 38(1): 93-97

ISSUE DATE:

1992-01

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/117440>

RIGHT:

男子外性器硬化性脂肪肉芽腫 2 症例の報告と 本邦報告72症例の統計的検討

小松病院泌尿器科 (名誉院長 : 井上彦八郎)

児島 康行, 井上彦八郎

関西医科大学第Ⅰ病理学教室 (主任 : 池原 進教授)

足立 靖, 池原 進

大島医院 (院長 : 大島 升)

大 島 升

SCLEROSING LIPOGRANULOMA OF THE MALE GENITALIA: REPORT OF 2 CASES

—REVIEW OF 72 CASES REPORTED IN JAPAN—

Yasuyuki Kojima and Hikohachiro Inoue

From the Department of Urology, Komatsu Hospital

Yasushi Adachi and Susumu Ikehara

From the Department of the First Pathology, Kansai Medical University

Minoru Ohshima

From the Ohshima Clinic, Osaka

Two cases of male patients (49 and 36 y.o.) with sclerosing lipogranuloma of the genitalia are reported. They denied having received any injection of exogenous substances or having suffered from any trauma. We discuss the clinical features and review previously published papers reporting similar cases. We would like to propose that sclerosing lipogranuloma that is not caused by the injection of exogenous substances should be dealt with as a new disease entity.

(Acta Urol. Jpn. 38: 93-97, 1992)

Key words: Sclerosing lipogranuloma, Male genitalia

緒 言

1950年, Smetana ら¹⁾ は, 男子外性器の外傷後に生じた, 異物注入の既往のない硬化性脂肪肉芽腫を報告し, その発生機序が争点となった. 本邦では, 1967年に西²⁾ が, 外陰部に生じた原因不明の肉芽形成を, 非特異性慢性炎症と報告し, これが, 異物注入の既往のない, 外性器に発生した硬化性脂肪肉芽腫の本邦報告第1例目と考えられる. その後, 異物型肉芽腫と異なる男性の外性器に発生する硬化性脂肪肉芽腫の症例が増加し, 新しい疾患単位として注目されている. 今回われわれは, なんら誘因もなく発生したと考えられる本症の2例を経験したので, 若干の文献的考察を

加えて報告する.

症 例

症例1

患者: T.S., 49歳, 男性, 銀行員

主訴: 陰茎根部腫瘍

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1989年11月上旬, 性交時に偶然に陰茎根部の腫瘍に気づき, 11月15日, 大島医院を受診し, 同日当科へ紹介された. 腫瘍は陰茎根部より陰囊内に存在し無痛性であった. 患者は外傷の既往なく, また陰囊内異物注入を否定したので, 陰囊内腫瘍の疑いにて11月25日入院となった.

入院時現症：身長 175 cm, 体重 66.5 kg, 血圧 122/86 mmHg, 脈拍 60/min, 整。胸腹部異常なし。表在リンパ節は触知せず。精巣・精巣上体・前立腺は触診上異常を認めなかった。腫瘤は陰嚢内中央部で会陰部より陰茎根部に向かって存在し、さらに陰茎根部で左右に分かれて陰茎を取り囲み、全体としてY字型を呈していた。腫瘤は圧痛なく表面不整、弾性硬で尿道海綿体とは僅かに可動性を有していた。陰嚢皮膚には異常を認めなかった (Fig. 1)。

入院時検査成績：尿所見、異常を認めず。末梢血液所見, WBC $6.0 \times 10^3/\text{mm}^3$, RBC $502 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 15.9 g/dl, Ht 46.3%, Plt $29.7 \times 10^4/\text{mm}^3$ 。白血球分画, Seg. 57%, Sta. 2%, Eos. 3%, Bas. 0%, Mon. 7%, Lym. 31%。血液生化学所見では尿酸値が 8.8mg/dl と高値を示す以外異常を認めなかった。CRP (－)。IgE 141 IU/ml。また 75 g GTT は境界型で、尿細菌培養、尿結核菌培養、糞便虫卵検査はいずれも陰性であった。

X線検査所見：胸部写真、腹部単純写真、排泄性腎盂造影、尿道膀胱造影に異常は認めなかった。

以上より陰嚢内腫瘍を疑い、1989年11月27日、腰麻下に陰茎根部会陰部側で弧状に切開を加え、腫瘤摘除術を施行した。腫瘤は陰嚢内中央で尿道海綿体を覆うように存在し、さらに陰茎根部で左右に分かれ両鼠径部に連続して存在していた。腫瘤は灰白色を呈しており、尿道海綿体およびその他の周囲組織との剝離は比較的容易であった。なお精巣・精巣上体・精索とは離れて存在していた。

病理組織学的所見：脂肪組織中に、異物型巨細胞を主体とし、リンパ球、好酸球の浸潤を伴った肉芽腫を認めた。チール・ニールセン染色では結核菌は認められず真菌検出を目的に、グロコット染色を施行したが、陰性で sclerosing lipogranuloma と診断した (Fig. 2)。

術後9カ月を経過し再発を認めない。

症例 2

患者：K.I., 36歳, 男性, 会社員

主訴：陰茎根部腫瘍

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：1990年7月6日、入浴時に偶然、陰茎根部の無痛性腫瘍に気付き、7月10日当科を受診した。腫瘤は陰茎根部の背側に存在し無痛性であった。患者は外傷、異物注入の既往なく、症例1と同様の疾患を疑い、精査目的に7月26日入院となった。

入院時現症：身長 161 cm, 体重 54 kg, 血圧 122/86 mmHg, 脈拍 58/min, 整。胸腹部異常なし。表在

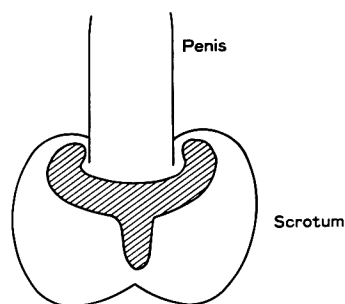


Fig. 1. Schematic view of case 1.

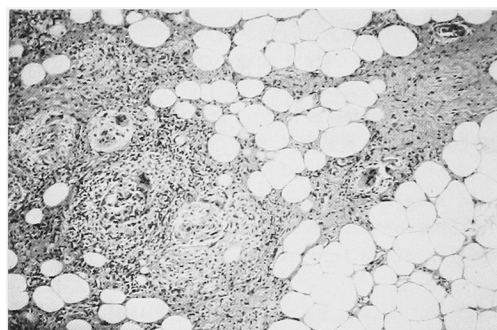


Fig. 2 Case 1-microscopic photograph of the sclerosing lipogranuloma. Infiltration of foreign-body giant cells is noted. H&E, reduced from $\times 100$.

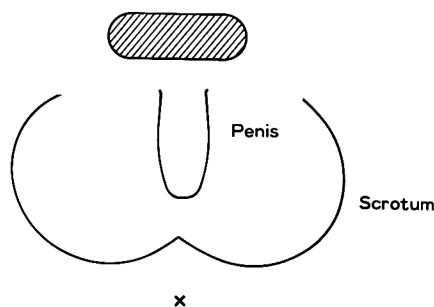


Fig. 3. Schematic view of case 2.

リンパ節は触知せず。精巣・精巣上体・前立腺は触診上、異常を認めなかった。腫瘤は陰茎根部の背側に存在し圧痛なく、表面不整、弾性硬で可動性を有していた。また陰嚢皮膚には異常を認めなかった (Fig. 3)。

入院時検査成績：尿所見、異常を認めず。末梢血では、WBC $7.3 \times 10^3/\text{mm}^3$, RBC $527 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 16.0 g/dl, Ht 46.6%, Plt $21.0 \times 10^4/\text{mm}^3$ 。白血球分画, Seg. 32%, Sta. 11%, Eos. 12%, Bas. 1%, Mon. 2%, Lym. 42% と末梢血好酸球増多を認めた。血液生化学所見は異常を認めず、CRP (－)。尿細菌

培養, 尿結核菌培養, 糞便虫卵検査はいずれも陰性であった。

X線検査所見: 胸部写真, 腹部単純写真, 排泄性腎盂造影, 尿道膀胱造影に異常は認めなかった。

以上より陰茎根部に発生した, 症例1と同様の疾患を疑い, 1990年7月27日, 局麻下に開放生検術を施行した。腫瘍は灰白色で, 恥骨前面皮下より陰茎根部背側まで連なる境界不明瞭な索状物として存在し, 生検のみを施行した。

病理組織学的所見: 症例1と同様異物型巨細胞を中心とした肉芽腫を認め, sclerosing lipogranulomaと診断した。術後, 消炎剤 (seaprose S), および抗菌剤 (ofloxacin) 投与にて経過観察していたところ, 1カ月目には腫瘍を触知しなくなった。また末梢血好酸球も正常化した。術後3カ月を経過したが再発を認めない。

考 察

硬化性脂肪肉芽腫は皮下の脂肪組織内に肉芽腫性変化を生じる特有の反応性病変である。従来, 治療および美容上の目的として油脂やパラフィンなどの異物注入を行うことによって肉芽腫が生じることは報告されていた。

1950年, Smetana ら¹⁾は, 男子外性器の外傷後に生じた, 異物注入の既往のない症例を報告した。彼らは自験例および過去に報告された症例9例を集め, これらは外傷後になんらかの形で脂肪が刺激され, 非生理的な物質に変化していくためと考えた。さらにこれらのうち, 外傷の既往のないものも存在し, その発生機序が争点となった。

しかしその後, これら内因性脂肪壊死を否定した報告や, 患者が外性器という部位の特殊性から異物注入を否定している可能性も論じられてきた²⁾。

1977年, Oertel ら⁴⁾は, Smetana らの報告した症例を含む, 男子外性器硬化性脂肪肉芽腫23例につき, 赤外分光分析を用い再検した結果, 21例にパラフィンを検出し, 結局, 皮下への異物注入が原因であると説明した。しかし一方で dermoid cyst の破裂によっても同様の反応が起きることより, 内因性脂肪壊死の存在も否定できないとした。

事実, 1988年, Matsuda ら⁵⁾は, 陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の4例を報告し, これらにつき赤外分光分析などを用い調べた結果, 外因性物質を認めず, 異物注入によらず硬化性脂肪肉芽腫が発生することを証明した。

今回, われわれは, 本邦における自験例を含めた異

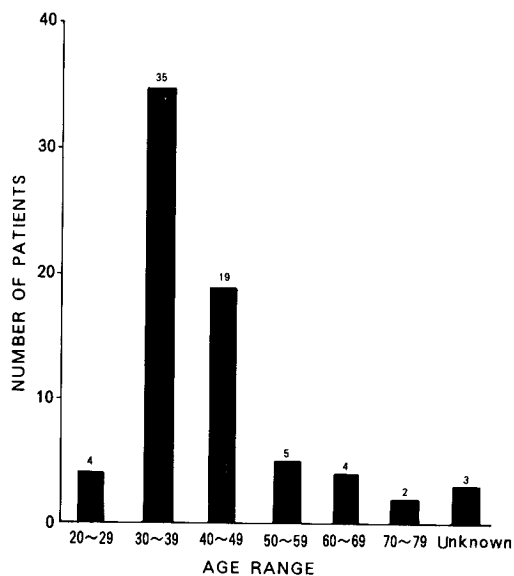


Fig. 4. Age distribution of 72 patients with sclerosing lipogranuloma of the male genitalia. Patients' ages at the time of treatment ranged from 27 to 79 years (median 41.7 years). The majority of patients were 30 to 49 years old.

物注入の既往のない原因不明の男子外性器硬化性脂肪肉芽腫, あるいは本疾患と考えられる72例を集め検討した。

年齢は27~79歳(平均41.7歳)で30から40歳代にピークを認める (Fig. 4)。ほとんどの症例が無痛性腫瘍を主訴としており, 自覚してから受診までの期間も, 20年前から自覚していたとされる1例⁶⁾を除き, 2日~2カ月と比較的早期に受診している。形態的に佐藤ら⁷⁾は3型に分類しており, これによると, 本症例1の如く, 陰嚢内中央より陰茎根部を取り囲むY字型を呈した腫瘍をⅠ型, 本症例2の如く陰茎根部の中央付近に腫瘍の存在するものをⅡ型, 精索または片側陰嚢内に存在するものをⅢ型と分類しており, これにより72例を分類すると, Ⅰ型が50例(69%), Ⅱ型が17例(24%), Ⅲ型が4例(6%), 不明1例(1%)と, 陰嚢内中央より陰茎根部を取り囲むY字型を呈したⅠ型の腫瘍を高率に認め, 異物型肉芽腫と比較し特徴的な所見といえる。さらに本症例2の如く, 生検あるいは部分切除術後, 消炎剤などの保存的治療にて経過観察中, 腫瘍が自然消退したものを20例(28%)認め, 異物注入の既往のない硬化性脂肪肉芽腫の大きな特徴といえる。自然消退までの期間も数週から数カ月以内と比較的短期間であった。以前より近畿地方を中心に多発す

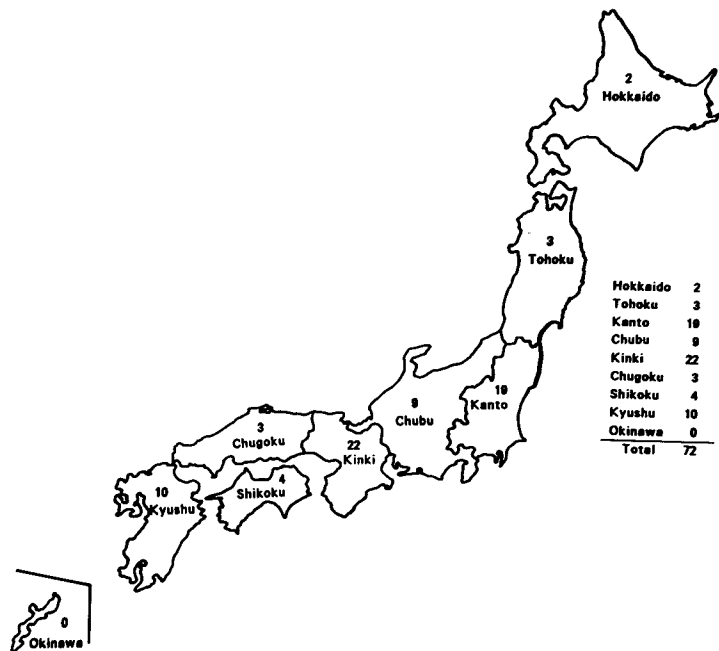


Fig. 5. Distribution of 72 reported cases (in Japan) of sclerosing lipogranuloma of the male genitalia (1967-1990).

る傾向があるといわれてきたが、確かに近畿地方からの報告が22例（31％）と1番多いが、その他関東地方からも19例（26％）と、沖縄地方を除く全国から報告されており、明確な地域的特殊性はないものと考えられる（Fig. 5）。発生原因については不明であるが、末梢血好酸球増多を19例（26％）に認め、なんらかのアレルギー性機序が考えられている。なおこれらの特徴としてほとんどの症例で腫瘍摘除後、あるいは腫瘍の自然消退後に末梢血好酸球が正常化しているが、詳細は不明である。その他考えられる原因として外傷2例^{8,9)}、陰茎・陰嚢部の圧迫2例^{10,11)}、寒冷暴露2例¹²⁾ ofloxacin 点鼻薬に起因したアレルギー症状に伴って生じたと考えられる1例¹³⁾が挙げられている。従来、幼少時の寒冷暴露後に発症する同様の状態を Hinmann¹⁴⁾が scrotal fat necrosis として報告したが、成人では陰嚢皮下脂肪が二次性徴とともに消退することより発症しないとされていた。しかし坪ら¹²⁾は成人にも会陰部より陰茎根部まで皮下脂肪が存在しており、ここに発症すれば本疾患に特徴的なY字型を呈するとした。事実、彼らの報告した2例は陰嚢部寒冷暴露と密接に関係していると思われる。

病理組織学的には、本症例と同様の所見を示すが、壊死や細胞浸潤を伴う時期、巨細胞を伴う時期、繊維化を示す時期に分け、この肉芽腫から繊維化へ主像が移れば腫瘍が自然消退するとの報告もある¹⁵⁾。

治療後の経過として、腫瘍摘除後の再発を6例（8％）に認める。1例は陰嚢部寒冷暴露が原因と考えられ、陰嚢部冷電法を中止することにより消失し¹²⁾、1例は再発したものの増大傾向なく消炎剤投与にて経過観察中である¹⁶⁾。残る4例は消炎剤投与などにより自然消退している^{9,11,17)}。いずれも悪性化の報告はない。合併症として、両側下腿皮下にも硬化性脂肪肉芽腫を伴った1例¹⁸⁾と、手、足関節の腫脹を伴った1例¹³⁾とが報告されている。

これら異物注入の既往のない硬化性脂肪肉芽腫は本邦ですでに72例報告されているが、いまだにその発症原因は不明であり、また赤外分光分析などの生化学的分析にて内因性脂肪壊死が原因であると確診されているものはこの内6例^{8,19)}しかないが、坪ら¹²⁾の指摘する様に新しい疾患単位として独立されるべき時期にきていると思われる。またその特徴的な臨床所見より、異物型肉芽腫あるいは他の陰嚢内腫瘍病変との鑑別は比較的容易であると考えられる。

最後に、本邦報告72例の臨床所見をまとめ Table 1 に示したが、治療は自然消退することと、その後の再発も少ないといったこととより、生検にて病理組織学的に確診後は、保存的治療にて自然消退を期待し、経過観察すべきであると考えられる。

Table 1. Summary of 72 reported cases of sclerosing lipogranuloma of the male genitalia.

年 齢	27—79 (41.7) 歳, 30—40代にピーク
発生原因	アレルギー? (薬物アレルギーを含む), 外傷, 物理的圧迫, 寒冷暴露 etc.
症 状	ほとんどが無痛性腫瘍で4例に有痛性腫瘍
腫瘍形態	I型50例 (69%), II型17例 (24%), III型4例 (6%), 不明1例 (1%)
発生地域	沖縄地方を除く全国
治 療	摘除術49例 (68%), 部分切除術4例 (6%), 高位除根術2例 (3%), 生検後保存的治療17例 (24%)
自然消退	20例 (28%), 数週から数カ月以内
再 発	6例 (8%)
合 併 症	両側下腿皮下にも硬化性脂肪肉芽腫が発生した1例と手, 足関節の腫脹を伴った1例

結 語

男子外生殖器に発生した原因不明の硬化性脂肪肉芽腫の2例を報告するとともに, 本邦報告72症例を集計し若干の文献的考察を加えた。

本論文要旨の一部は第131回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Smetana HF and Bernhard W: Sclerosing lipogranuloma. Arch Pathol 50: 296-325, 1950
- 2) 西 守哉: 外陰部癌をうたがわれた非特異性炎症の症例. 日泌尿会誌 58: 1092-1093, 1967
- 3) Newcomer VD, Graham JH, Schaffert RR, et al.: Sclerosing lipogranuloma resulting from exogenous lipids. Arch Dermatol 73: 361-372, 1956
- 4) Oertel YC and Johnson FB: Sclerosing lipogranuloma of male genitalia. Review of 23 cases. Arch Pathol Lab Med 101: 321-326, 1977
- 5) Matsuda T, Shichiri Y, Hida S, et al.: Eosinophilic sclerosing lipogranuloma of the male genitalia not caused by exogenous lipids. J Urol 140: 1021-1024, 1988
- 6) 佐藤伸二, 上原康雄, 中牟田誠一: 陰囊, 陰茎部の Sclerosing Lipogranuloma の1例. 西日泌尿 49: 1683, 1987
- 7) 佐藤直秀, 桜山由利, 石川堯夫, ほか: 原発性陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の2例. 臨泌 43: 525-528, 1989
- 8) 宮崎良春, 藤澤保仁, 石井 竜: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 西日泌尿 50: 1446, 1988
- 9) 田村雅人, 古川教子, 宮本忠幸, ほか: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の4例. 日本アンドロロジー学会第9回学術大会講演抄録集: 100-101, 1990
- 10) 深堀能立, 鎗木 豊, 猿木和久, ほか: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 北関東医学 38: 175-182, 1988
- 11) 在原和夫, 増田愛一郎, 稲土博右, ほか: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 日泌尿会誌 81: 658, 1990
- 12) 坪 俊輔, 野々村克也, 小林真也, ほか: 原発性陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の2例. 日泌尿会誌 79: 155-159, 1998
- 13) 河原 優, 清水保夫, 大田修平, ほか: Ofloxacin 点鼻薬アレルギー症状に併発した陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 西日泌尿 52: 1639-1643, 1990
- 14) Hinman F and Johnson CM: Differential diagnosis of acute fat necrosis in the scrotum. J Urol 41: 726-732, 1931
- 15) 鷹巣晃昌, 畑山 忠, 濱崎周次, ほか: 陰囊内に認めた脂肪性肉芽腫. 病院病理 5: 58, 1987
- 16) 中田誠司, 海老原和典, 浦野悦郎, ほか: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫. 臨泌 42: 373-375, 1988
- 17) 寺崎 博, 土岐直隆, 下村貴文, ほか: 陰囊内に発生した硬化性脂肪肉芽腫の1例. 日泌尿会誌 79: 1734, 1988
- 18) 岡本圭生, 福山拓夫, 岡本英一, ほか: 両側下肢にも腫瘍を認めた陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の1例. 日泌尿会誌 81: 332, 1990
- 19) 小泉雄一郎, 石塚源造, 山口 哲, ほか: 陰囊内硬化性脂肪肉芽腫の2例. 日泌尿会誌 80: 978, 1989

(Received on February 26, 1991)
(Accepted on May 22, 1991)